



SAHLGRENSKA AKADEMIN

Institutionen för neurovetenskap och fysiologi
Sektionen för hälsa och rehabilitering
Enheten för logopedi

283

Talet hos 3-7-åringar födda med unilateral läpp-käk-gomspalt opererade med Göteborgsmetoden i Bukarest

**Speech Outcome in 3-7 year old Children with
Unilateral Cleft Lip Palate Operated with the Gothenburg
Technique in Bucharest**

Rebecca Petersson
Sofia Portström

Examensarbete i logopedi
30 högskolepoäng
Vårterminen 2015

Handledare
Christina Persson
Jan Lilja

Talet hos 3-7-åringar födda med unilateral läpp-käk-gomspalt opererade med Göteborgsmetoden i Bukarest

Rebecca Petersson
Sofia Portström

Sammanfattning. Studiens syfte var att följa upp talet hos barn med läpp-käk-gomspalt opererade med Göteborgsmetoden på barnsjukhuset Maria Sklodowska Curie. Arton deltagare med unilateral läpp-käk-gomspalt spelades in och bedömdes med ett talmaterial på ordnivå. Utifrån fonetisk transkription beräknades andel korrekt producerade konsonanter samt talavvikelser specifika för läpp-käk-gomspalt. Förståelighet skattades och en summa för velofarynxfunktion beräknades. Andelen korrekt producerade konsonanter var $Md=61\%$ och korrelerade signifikant positivt med ålder. Tillbakadragen oral artikulation förekom hos 61% av deltagarna med en högre förekomst hos de yngre deltagarna. Icke-oral artikulation förekom hos 28% av deltagarna. Tio barn uppvisade inkompetent velofarynxfunktion. Föräldraskattningen av förståelighet visade på en något nedsatt förmåga ($Md=4$). Resultatet indikerar att en stor andel av deltagarna uppvisar talavvikelser relaterade till spalt. Det observerades en minskning av tillbakadragen oral artikulation och en ökning av andel korrekt producerade konsonanter med ökad ålder. Jämförelse med resultat från Göteborg måste föregå ett uttalande om implementeringsutfallet.

Nyckelord: unilateral läpp-käk-gomspalt, tal, tvärspråklig bedömning, Göteborgsmetoden, reliabilitet

Speech Outcome in 3-7 year old Children with Unilateral Cleft Lip Palate Operated with the Gothenburg Technique in Bucharest

Abstract: The aim of the study was to assess the speech outcome in children with cleft palate operated with the Gothenburg Technique at Maria Sklodowska Curie Children's Hospital. Eighteen participants with unilateral cleft lip palate were recorded and assessed through a single word test. Percent consonants correct and cleft speech characteristics were calculated after phonetic transcription. Intelligibility ratings and velopharyngeal composite scores were reported. Percent consonants correct were obtained ($Md=61\%$) and significantly correlated with age. Retracted oral articulation was present in 61% of the participants and a higher prevalence was observed in the younger participants. Non-oral articulation was observed in 27% of the participants. Ten children had incompetent velopharyngeal function. Parental ratings of intelligibility showed a reduced ability ($Md=4$). The results imply that a high percentage of the participants have cleft related speech characteristics. A decrease of retracted oral articulation and an increase of percent consonants correct were observed with increasing age. A comparison to the result from Gothenburg is necessary to enable a statement about the implementation outcome.

Key words: Unilateral cleft lip palate, speech, cross-linguistic assessment, Gothenburg Delayed Hard Palate Closure Technique, reliability

Läpp-käk-gomspalt (LKG) uppstår hos en av 700 barn (Mossey & Castillia, 2003) där avvikande talutveckling är en konsekvens. Talavvikelseerna beror på både strukturella och funktionella avvikelser i orala vävnader. Den strukturella avvikelsen opereras för att minska påverkan på bland annat tal (Atkinson & Howard, 2011). I de flesta fall finns ett LKG-team som från födseln ansvarar för uppföljning av barnets utveckling för att ge de bästa förutsättningarna för ätande, tal, hörsel (Scherer & Louw, 2011), tillväxt (Lohmander, 2011), bett och utseende (Shkoukani, Lawrence, Libertz & Svider, 2014). Aspekter av talet som påverkas vid LKG brukar delas in i passiva och aktiva talavvikelser. Passiva uppkommer till följd av strukturella och funktionella avvikelser såsom restspalt eller fistel och inkompetent velofarynxfunktion och innefattar resonansavvikelser samt nasalt luftläckage, trycksvag realisering och nasal realisering av tryckstarka konsonanter. Aktiva talavvikelser uppstår däremot som en kompensation för strukturella och funktionella avvikelser och innefattar bland annat tillbakadragen oral artikulation samt icke-oral artikulation. Icke-oral artikulation innefattar glottal, faryngeal och nasal realisering (Lohmander et al., 2005; Hutters & Brøndsted, 1987) och är atypiska artikulationsställena i många språk.

Lohmander och Olsson (2004) påtalar i en litteraturstudie att det saknades redogörelser för metodik och standardiserade tillvägagångssätt för bedömning och analys av talet vid LKG. Förfarandet vid perceptuell bedömning ser alltså olika ut. Skalor är frekvent förekommande vid bedömning av talvariablerna hypernasalering, nasalt luftläckage, artikulation och varierar mellan dikotoma och flergradiga skalsteg. I talet hos barn med LKG är tryckstarka konsonanter de mest sårbara språkljuden (Van Demark, 1969). Vid bedömning bör de sårbara språkljuden finnas i stark position, vilket innebär att mållkonsonanten är först i den betonade stavelsen. På så vis möjliggörs en mer distinkt artikulation och därmed minskar kontextens påverkan på målljudet (Hutters & Henningsson, 2004; CLISPI, 2014). Gällande vokaler har det påvisats att slutna vokaler kräver större kraft för velofarynxutslutning (Kuehn & Moon, 1998) och är därför passande vid bedömning av hypernasalering (Hutters & Henningsson, 2004). Lohmander et al (2005) har utformat ett reliabilitets- och validitetsprövat test på svenska, SVenskt Artikulations- och Nasalitets-TEst, där transkription på ord- och meningsnivå samt skattning av resonansavvikelser, nasalt luftläckage och tryckreducerad artikulation ingår. Analys av transkriptioner möjliggör beräkning av andel korrekt producerade konsonanter (PCC) och andel talavvikelser framför respektive bakom velofarynx. Ett liknande test har utformats i Storbritannien, Cleft Audit Protocol for Speech – Augmented, där skalstegen vid skattning dessutom getts tydligare definitioner (John, Sell, Sweeney, Harding-Bell & Williams, 2006). Ett annat sätt att bedöma velofarynxkompetens är att beräkna en sammanvägd poäng av flera talvariabler som på något sätt reflekterar velofarynxfunktion (Lohmander & Howard, 2011). Sensitivitet och specificitet för en sammanvägd poäng för velofarynxfunktion undersöktes i en studie av Dotevall, Lohmander-Agerskov, Ejnell och Bake (2002). De undersökta talvariablerna hypernasalering, nasala genomslag, velofaryngeala friktionsljud samt trycksvaga konsonanter korrelerades med den visuellt undersökta velofarynxfunktionen och visade på en stark korrelation. I andra studier har en sammanvägd poäng för velofarynxfunktion (VPC-summa) även inkluderat förekomst av icke-oral artikulation (Lohmander, Willadsen, Persson, Henningsson, Bowden & Hutters, 2009; Pereira, Sell & Tuomainen, 2013). Utmaningen vid bedöm-

ning av talet vid LKG är att få fram ett entydigt heltäckande resultat då flera olika aspekter kan vara påverkade.

I Internationell klassifikation av funktionstillstånd, funktionshinder och hälsa (ICF) beskrivs hur en individs hälsotillstånd kan ses ur olika perspektiv. Fokus ligger på funktionsnedsättningens påverkan snarare än dess orsak och därmed även på omgivningsfaktorer (Socialstyrelsen, 2003). Avvikelse i struktur och funktion innefattar vid LKG anatomiska avvikelser, konsonantavvikelse och velofarynxfunktion medan aktivitets- och delaktighetsnivå innefattar förståelighet och kommunikativ delaktighet (Hartelius, 2008; Havstam & Lohmander, 2011). Förståelighet kan definieras på olika sätt. Duffy (2012) definierar det som "Intelligibility is the degree to which a listener understands the acoustic signal produced by a speaker" (s.84). Förståelighet hos personer med LKG är något som undersöks allt oftare enligt en översiktsartikel av Whitehill (2002). I de granskade artiklarna har förståeligheten undersökts främst genom skattningsskalor, transkription av ord och fonem samt poäng från artikulationstester där bedömningar gjorts av både experter inom området likväl som naiva lyssnare (Whitehill, 2002). Förståelighet hos barn och unga vuxna födda med LKG har visat sig vara signifikant lägre än för barn och unga vuxna utan LKG (Hodge & Gotzke, 2007; Van Lierde, De Bodt, Van Borsek, Wuyts, Van Cauwenberge, 2002).

En parameter som kan antas påverka talet hos barn med LKG är förekomst av restspalt eller fistel i hårda eller mjuka gommen. Restspalt är en avsiktligt lämnad spalt som planeras att slutas vid ett senare tillfälle. Studier påvisar att förekomst av restspalt påverkar talet, men olika talavvikelse framhålls som mest framträdande. En del har funnit att öppen restspalt ger signifikant högre grad av nasalt luftläckage och tendenser till högre grad av hypernasalering än en funktionellt slutet eller övertäckt restspalt (Lohmander-Agerskov, Friede, Lilja & Söderpalm, 1996a; Lohmander-Agerskov, Dotevall, Lith & Söderpalm, 1996b). Oronasala fistlar kan däremot uppstå som komplikation av spaltlutning (Campbell Reid, 1962). Fistel har påvisats bidra till någon eller några av talvariablerna nasalt luftläckage, hypernasalering och trycksvag artikulation (Bureau, Penko, McFadden, 2001; Karling, Larson & Henningsson 1993; Henningsson & Isberg, 1987). Det finns teorier om att det till viss del går att kompensera för förekomsten av restspalt eller fistel, vilket då leder till tillbakadragen oral artikulation (Lohmander-Agerskov, 1998). Avseende storleken på restspalten eller fistelns påverkan på tal finns tvetydiga resultat men det förefaller vara förekomsten snarare än storleken som påverkar talresultatet (Lohmander, Persson & Owman-Moll, 2002; Henningsson & Isberg, 1987).

Sekretorisk mediaotit förekommer oftare hos barn med LKG än hos barn utan LKG (Flynn, 2013). Sambandet har en anatomisk förklaring då musklerna tensor veli palatini och levator veli palatini är förankrade i örontrumpeten, vilken dränerar mellanörat och utjämnar lufttrycket då mjuka gommen spänns och lyfts. Spalten i mjuka gommen påverkar musklernas funktion och därigenom uppstår den nedsatta mellanörestatusen (Atkinson & Howard, 2011). Sekretorisk mediaotit kan påverka hörseln negativt och således ge konsekvenser för talet, men det har varit svårt att påvisa en klar korrelation mellan hörselnedsättning och talutveckling hos barn med LKG. Till viss del har det påvisats vid lägre åldrar men den signifikanta korrelationen förefaller inte bestå vid högre åldrar (Lohmander, Olsson & Flynn, 2011; Broen, Devers, Doyle, Prouty, Moller, 1998). En del författare betonar att operation av mjuka gommen har ingen eller liten

påverkan på mellanörestatus (Dhillon, 1988; Robinson, Lodge, Jones, Walker & Grant, 1992) medan andra rapporterar att mellanörestatusen återställs efter operation i 86% av fallen (Gordon, Jean-Louis & Morton, 1988). Tuncbilec, Özgür och Belgin (2003) skriver att förbättringen antagligen inte enbart beror på slutning av mjuka gommen utan snarare som en följd av kombinationen slutning, utvecklingsfaktorer och behandling av mellanöreproblem.

Det finns ingen konsensus gällande operationsmetod för LKG. Mellan åren 1996 och 2000 användes 194 olika operationsmetoder på 201 olika europeiska centra för LKG-vård (Shaw et al., 2001). En uppdelning av *primär kirurgi* brukar göras i en- eller tvåstegsmetoder, där slutning av mjuka och hårda gommen sker i en eller två seanser. Idag dominerar fortfarande enstegs-metoder på kliniker i världen. Ett exempel på en vanlig enstegsmetod är von Langenbeck som har modifierats på olika vis. I vissa tvåstegsmetoder görs först en slutning av hårda gommen och sedan en slutning av mjuka gommen, medan det i andra metoder görs tvärtom (Lohmander, 2011). I Göteborgsmetoden sluts den mjuka gommen först och den hårda gommen senare. Det unika i tekniken är hur mjuka gommen sluts (J. Lilja, personlig kommunikation, 2 mars, 2015). På Sahlgrenska Universitetssjukhuset i Göteborg utförs första slutningen vid 6 månader och andra vid cirka 2 års ålder (Sahlgrenska Universitetssjukhuset, 2012). Olika bra resultat för tal har påvisats för olika operationsmetoder, oavsett tidpunkt för slutning (Lohmander, 2011). Målet och den stora utmaningen med kirurgin är att förbättra talet utan att riskera hämning av maxillär tillväxt. En sammanfattning av resultat från flera studier visade att glottal artikulation var den främsta talavvikelsen vid enstegsmetoder till skillnad från tvåstegsmodeller med sen slutning av hårda gommen där tillbakadragen oral artikulation framhölls som största problem (Lohmander, 2011). I vissa fall krävs ytterligare operation om talet är påverkat av nedsatt velofarynxfunktion, så kallad *sekundär kirurgi* (Riski, 2011), vilken kan innefatta exempelvis svalglambå.

För att säkra kvalitet och jämlikhet i vården för personer med LKG har olika forskningsprojekt startats, däribland Eurocleft, Scandcleft och TOPS. I projekten har jämförelser av olika operationsmetoder och protokoll för bland annat timing utförts, alternativt är pågående (Lohmander et al., 2009; Shaw et al., 2001; TOPS, 2013). Andra studier har försökt att sammanställa viktiga aspekter för jämförelse av talutveckling hos opererade barn med LKG (Henningsson, Kuehn, Sweeney, Trost-Cardamone, Whitehill, 2008) och vid tvärspråkliga bedömningar (Hutter & Henningsson, 2004). I Storbritannien har standarder utformats för att möjliggöra en utvärdering av LKG-vården. Standarderna har satts upp utifrån litteraturgranskningar och prövats nationellt (Britton et al., 2014). Tillsammans bidrar studierna till en mer strukturerad och standardiserad metodik för talbedömning som underlättar internationella och nationella jämförelser mellan centra.

På Maria Sklodowska Curie Children's Hospital (MSCCH) i Bukarest behandlas barn med LKG från hela Rumänien. Det finns ännu ingen logoped direkt knuten till LKG-teamet, vilket gör att barnens talutveckling inte följs upp. År 2009 ändrades operationsprotokollet från von Langenbeck till Göteborgsmetoden på efterfrågan av teamet på MSCCH. En implementering av protokollet har gjorts i ett samarbete med Sahlgrenska Universitetssjukhuset (SU) där en stegvis inlärningsprocess skett genom att kirurger från SU och MSCCH opererade tillsammans vid flera tillfällen. Protokollet har följts i

den mån verksamheten tillåtit, men det har varit svårt att göra uppföljningar samt att utföra operationerna vid rätt åldrar. Mellan november 2009 och november 2014 har 251 slutningar av mjuka gommen utförts och 96 slutningar av hårda gommen. I en studie av Spataru och Mark (2014) utvärderades det nya protokollet och goda resultat framhölls i utförandet av kirurgi med färre sekundära operationer och färre komplikationer jämfört med von Langenbeck. Dessutom ledde det nya protokollet till att barnen opererades vid yngre åldrar jämfört med tidigare operationsmetod där slutningen gjordes vid 18 månader. I slutsatsen påtalas behov av utvärdering av tal och käktillväxt, regelbundna uppföljningar samt framtida jämförelser med resultaten från Göteborgs LKG-team. Föreliggande studies syfte var att utvärdera talet hos rumänstalande barn som opererats med Göteborgsmetoden vid MSCCH utifrån ett perspektiv om hur väl operationsmetoden implementerats. De frågeställningar som undersöktes var:

- Hur är talet hos barn som opererats med Göteborgsmetoden vid Maria Sklodowska Curie Children's Hospital i Bukarest mätt i talvariablerna PCC, artikulationsavvikelse (icke-oral artikulation och tillbakadragen oral artikulation), velofarynx-funktion samt funktionell förståelighet?
- Påverkas talet av bakgrundsvariabler såsom ålder vid slutning av mjuka gommen, hörsel, förekomst av restspalt eller fistel, förekomst av andra missbildningar eller utvecklingsfaktorer och logopedkontakt?

Metod

Deltagare

Av 40 deltagare som matchade inklusionskriterierna total unilateral LKG, opererad med Göteborgsmetoden och ingen förekomst av syndrom, tillfrågades föräldrar/skötare till 35 barn om de ville delta i studien. De sju resterande kunde inte kontaktas på grund av avsaknad av kontaktuppgifter. Av de tillfrågade valde 18 att delta. Således bestod studiens deltagare av 18 barn, varav 12 pojkar och sex flickor. Deltagarnas ålder varierade mellan 3:6 år och 7:6 år (42-90 månader). Medianen för ålder vid operation av mjuka gommen var 16 månader och av hårda gommen 33,5 månader (tabell 1). Ingen av deltagarna hade fått en bentransplantation, vilket innebär att samtliga deltagare hade en kvarstående käkspalt. Samtliga föräldrar/skötare angav rumänska som barnets förstaspråk.

Tabell 1

Bakgrundsinformation för deltagare på gruppnivå.

Bakgrundsvariabler	Central- och spridningsmått eller förekomst
Ålder vid testning	3:6-7:6 år (42-90 mån) $M=62$ mån, $Md=59,5$ mån, $s=15,5$ mån
Ålder vid slutning av mjuka gommen*	1:0-3:3 år (12-39 mån), $M=20,3$ mån, $Md=16,0$, $s=8,8$ mån
Ålder vid slutning av hårda gommen	2:0-4:10 år (24-58 mån). $M=34,6$ mån, $Md=33,5$ mån, $s=9,1$ mån
Antal deltagare med slutning av fistel/	3

restspalt och/eller svalglambå	
Antal deltagare med kvarstående fistel/ restspalt	2
Antal deltagare med hörselnedsättning	4
Antal deltagare med logopedkontakt	12
Antal deltagare med andra missbildningar	1 amniotiskt bandsyndrom**
andra påverkande utvecklingsfaktorer	1 lätt utvecklingstörning
	1 mindre hjärtnissbildning
	1 avsaknad av ytteröra
	1 skolios, prehallux, avsaknad av njure

*Data saknas för en deltagare. **Amniotiskt bandsyndrom kallas på engelska "amniotic band constriction/sequence" och ses därför inte som ett syndrom såsom i exklusionskriteriet utan som en missbildning.

Lohmander, Friede, Elander, Persson & Lilja, (2006) och O’Gara, Logemann & Rademaker (1994) noterade i sina studier förbättringar av flera talvariabler med tiden. I svenskan färdigställs fonemförrådet mellan 4 och 7 år (Nettelbladt, 2011) och vid 5 års ålder är samtliga fonem undersökta i föreliggande studie etablerade förutom /s/ (jämför Lohmander et al., 2005). I föreliggande studie var åldersspannet stort och därför delades gruppen in i en yngre och en äldre grupp. Då studieförfattarna inte fann några normer för tal- och språkutveckling på rumänska valdes 5 år som gränssättning. Både den yngre och den äldre gruppen innefattade nio deltagare vardera.

Forskningsetiska överväganden. Kontaktpersonen på MSCCH var ansvarig för att kalla deltagare, inhämta skriftligt samtycke från föräldrar samt för att ta beslut ifall en etikprövning av studien var aktuell. Varje deltagare gavs en kod för avidentifiering som användes vid analys och databearbetning. Kodnyckeln lämnades kvar på MSCCH.

Material

Ett protokoll för bedömningsförfarande togs fram. Protokollet innehöll frågor för bakgrundsinformation gällande deltagarens ålder, kön, ålder vid slutning av mjuka respektive hårda gommen, hörsel, fistelslutning, svalglambå, andra missbildningar, tidigare logopedkontakt och dagsform.

Eftersom inget talmaterial fanns tillgängligt har studieförfattarna skapat ett utifrån liknande kriterier som i Scandleft (Lohmander et al., 2009) och innefattade de sårbara språkljud i rumänska som är möjliga att jämföra tvärspråkligt. Talmaterialet innefattade en- till tvåstaviga ord, tre för respektive målljud där målljudet var i initial position och [s] förekom även 3 gånger finalt. Utöver sårbara språkljud inkluderades nasalen [n] och likvidan [l]. Således innehöll materialet 36 ord samt ytterligare två ord som kontroll för att barnet förstod uppgiften. Se tabell 2 för en sammanställning av talmaterialet. I största möjliga mån eftersträvades att målljudet förekom i stark position i respektive ord och att nasaler samt andra tryckstarka konsonanter inte förekom i samma ord. Där svårigheter att uppfylla dessa kriterier uppstod valdes företrädesvis ett ord med två tryckstarka konsonanter med samma artikulationsställe. Diftonger och konsonantkluster undveks, i synnerhet intill målljudet. För att undvika att nasal produceras i anslutning till målordet undveks ord med artikel innehållande nasal. För bedömning av hypernasal klang valdes

nio av samtliga ord ut med anledning av att de innehöll slutna eller halvslutna vokaler. Totalt förekom sju slutna och två halvslutna vokaler och ytterligare 5 vokaler med olika slutningsgrad i de nio orden, se tabell 2. Vid utformning av materialet och vid ordval utgick studieförfattarna från att testet skulle rikta sig till barn i åldrarna 4-6 år samt att avbildning av målordet skulle vara möjlig. Orden togs fram med hjälp av en rumänskalande logoped i Sverige. Orden presenterades i slumpmässig ordning. Med slumpmässig ordning avsågs att ord med samma målljud inte följde på varandra. Bilder till bildmaterialet hämtades från bilddatabaser, främst ARASAAC (Government of Aragon, 2014) men även från Pixabay (Pixabay, 2014). Eliciteringen gavs i första hand genom enbart bilden, om inte bildbenämning fungerade gavs semantisk prompting i form av semantiska ledtrådar eller gavs alternativa svarsalternativ där barnet fick välja mellan svar "a" eller svar "b", där "a" var målordet. Om detta inte heller fungerade skedde elicitering på repetition. Om det under testningen uppmärksammades att barnet producerade fler ord än målordet ombads barnet upprepa enbart målordet. Den semantiska prompting gav i stor utsträckning enligt framtagna instruktioner men utökades i vissa fall. Ingen fonetisk prompting var tillåten och föräldrar/skötare fick information om att inte påverka barnets produktion (jämför Lohmander et al., 2009; TOPS, 2013).

Tabell 2

Sammanställning av orden i talmaterialet. Målljuden i målorden är fetmarkerade och orden för bedömning av hypernasalering är markerade med asterisk.

Målord		
Klusiler	Frikativor	Nasaler/lateral
gură* (mun)	vis* (dröm)	nas (näsa)
tort (tårta)	sare (hoppa)	nai (panflöjt)
bilă* (kula)	sus* (upp)	nu (nej)
pui* (kycklingar)	far (fyr)	lupi* (vargar)
cucu* (gökens läte)	verde (grön)	lei (lejon)
dor (längta)	fată (flicka)	labă (tass)
cai (hästar)	soră* (syster)	
gară (järnvägsstation)	vară (sommar)	
tare (hård)	foc (eld)	
păr (hår)	jos (ner)	
bebe* (bebis)	val (våg)	
dar (gåva/present)	sare (salt)	
coca cola		
da (ja)		
păra (päron)		
goală (tom)		
baie (badkar/bada)		
tată (pappa)		

För bedömning av funktionell förståelighet användes the Intelligibility in Context Scale (ICS) (McLeod, Harrison & McCormack, 2012) och dess formella översättning på rumänska med engelsk undertext (se Charles Sturt University, 2014). Föräldern/ sköta-

ren skattade barnets förmåga att bli förstådd med sju olika samtalspartners under den senaste månaden. Skattningen gjordes på en femgradig skala där 1=aldrig, 2=sällan, 3=ibland, 4=ofta och 5= alltid. Ett exempel på en fråga var "Do your child's teachers understand your child?".

Instrument/apparatur. För inspelning av talbedömning användes inspelningsutrustning H4n/220EG Handy Recorder ZOOM och en mikrofon, RØDE NT4 med stativ. Mikrofonen placerades med kanten av stativets fot 40 cm från bordskanten framför barnet. Mikrofonen vinklades parallellt med bordet för att komma så nära barnets huvudhöjd som möjligt. De två första inspelningarna upptogs endast av inspelningsapparaten då mikrofonen var avslagen, vilket påverkade amplitud och förekomst av brus. Vid editering av inspelningarna användes datorprogrammet PRAAT 5404 win 64. Hörlurar av modellen SONY stereo headphones MDR-CD580 användes vid transkription och skattning av hypernasalering. Vid hörselbedömning gjordes en tonaudiometri med audiometern Harp Plus, Inventis, kalibrerad i januari 2015. För de otoakustiska emissionerna användes Echo Screen III, Natus, vilken kalibrerades i januari 2014.

Tillvägagångssätt

Talmaterial, bilder, föreslagen semantisk prompting och instruktioner diskuterades med personen som tolkade innan testning påbörjades, dels för att stämma av att materialet på rumänska var korrekt och rimligt dels för att alla inblandade i testningen var överens om de olika rollerna i testförfarandet. Smärre förändringar gjordes av den semantiska prompting och ett ords böjning förändrades utifrån bildens innehåll. För träning av instruktioner, samspel och övrigt förfarande testkördes talmaterialet med två rumänsktalande barn utan rapporterade tal- och språksvårigheter på sjukhuset (6 respektive 9 år). Insamlingen av data utfördes på MSCCH där personen som tolkade (en ST-läkare på barnkirurgavdelningen med mycket goda engelskkunskaper) tillsammans med en av bedömare (studieförfattarna) genomförde testningen av barnet samt samlade in uppgifterna till protokollet. Den andra bedömare närvarade i rummet och ansvarade för audioinspelningen samt dubbelkollade att samtliga delar av bedömningen utfördes; skriftligt samtycke, införande av ID-kod, bakgrundsinformation, talbedömning, oral undersökning, ICS och hörselundersökning. Utifrån klinikens verksamhet och deltagarens behov kunde ordningen förändras och tidsåtgången variera. Bedömningen som innefattade taltest, bakgrundsinformation, oral undersökning och ICS varierade mellan 20 och 40 minuter. Enbart taltestet tog för de flesta deltagarna från 10-20 minuter. Hörselbedömningen varierade mellan 15 och 45 minuter.

All testning, förutom av hörsel, utfördes på avdelningens kontor. De som närvarade vid bedömningen var deltagaren, dess förälder/skötare, personen som tolkade, bedömare och den assisterande bedömare närvarade. Enbart taltestet spelades in för vidare analys. Personen som tolkade repeterade efter barnets produktion av respektive ord för att möjliggöra identifiering i audioinspelningen (jämför Lohmander et al., 2009; TOPS, 2013). En renovering av sjukhuset genomfördes under tiden för testningarna vilket gjorde att bakgrundsljud förekom på inspelningarna.

För att undersöka bakgrundsvariabeln ålder för operation av mjuka gommen delades samtliga deltagare in i tidig respektive sen slutning, då det föreligger stor skillnad

mellan MSCCH och SU för tidpunkt vid slutning. Dessutom beskrivs i många operationsmetoder att slutning bör utföras före två års ålder. Därmed användes gjordes en uppdelning med avgränsning vid två år för sen slutning i föreliggande studie. Det var tolv deltagare med tidig slutning och fem deltagare med sen slutning.

En oral undersökning utfördes med hjälp av en ficklampa för att observera eventuell förekomst av fistel eller restspalt. Observationen noterades i protokollet på en redan avbildad gom. Annan noterbar avvikelse antecknades bredvid bilden. Förekomst av fistel och restspalt delades in i förekommande eller inte. Enbart fistel/restspalt bakom foramen incisivum räknades, då spalten inte är sluten framför foramen incisivum vid denna ålder. Den assisterande bedömaren konsulterades då behov uppstod under den orala undersökningen.

Hörselundersökningen utfördes i ett ljudisolerat rum på sjukhusets audiologiavdelning. En audiometri utfördes för tolv deltagare. För att beräkna tonmedelvärde användes frekvenserna 500 Hz, 1000 Hz, 2000 Hz och 4000 Hz. Om barnet var under fyra år inleddes testningen med screening genom otoakustiska emissioner (OAE) för frekvenserna 2000 Hz, 2500 Hz, 3200 Hz, 4000 Hz. Hörselundersökningarna utfördes av en audiolog eller audiologassistent. För ett barn gjordes tonaudiometri endast på ena örat och OAE på andra örat. I de fall där barnet inte ville medverka i en tonaudiometri användes resultatet från OAE, vilket gällde tre deltagare. För tre deltagare saknades data från både tonaudiometri och OAE på grund av svårigheter att medverka. I denna studie definierades hörselnedättning som ett tonmedelvärde över 20 dB på minst ett öra.

Logopedkontakt i denna studie står för att deltagaren fått logopedbehandling och inte enbart en bedömning. Dock fanns ingen gränssättning för omfattning och innehåll.

Analys och databearbetning. Bedömarna tränade transkription av två patientfall på hemsidan PUMA-LKG (Karolinska Institutets Universitetsbibliotek, 2015) där transkriptionen jämfördes och diskuterades mellan bedömarna. Frågor som uppstod diskuterades med erfaren LKG-logoped. Därefter tränades transkription av ytterligare åtta fall som hade ingått i en tidigare studie okänd för studieförfattarna. På samtliga ljudfiler presenterades talbedömningar på ordnivå av svensktalande barn med LKG. Den uppskattade tränings tiden var 20 timmar per bedömare. I samband med transkriptions träningen upprättades även riktlinjer för transkription. Träning inför skattning av hypernasalering gjordes gemensamt för samtliga bedömare; studieförfattarna och en erfaren LKG-logoped vid två tillfällen, sammanlagt tre timmar. Vid det första tillfället gjordes en kalibrering. Därefter skattade bedömarna ljudfiler separat som sedan diskuterades.

Inför analys av inspelat material klipptes de inspelade ljudfilerna ned till att enbart innehålla barnets produktion och tolkens repetition av respektive ord. Om barnet producerade ordet två gånger användes främst den första produktionen om inga störande ljud eller överlapp av barnets talproduktion förekom. Det var inte alltid möjligt att uppnå målet att deltagaren enbart skulle säga målordet för att minska påverkan från fonetisk kontext och för att underlätta klippning. Det observerades att nasala tvekljud var frekvent hos en del barn. Försök att klippa bort dem har gjorts. För bedömning av hypernasalering klipptes de nio utvalda orden ihop utan mellanrum i en fil för varje deltagare.

Målljuden i orden transkriberades med halvsnav fonetisk transkription enligt IPA och Extended IPA (The International Phonetic Association, 2014). Med halvsnav transkription åsyftas artikulationsställe, artikulationssätt, typ av luftström och andra diakritiska tecken, exempelvis trycksvag realisering och på- och avtoning, men inte aspiration. Efter transkription beräknades PCC utifrån kriteriet att ingen gräns för artikulationssätt eller artikulationsställe fick överskridas så att fonembyte uppstod med undantag för på- och avtoning då bedömarna inte behärskade rumänska.

Talavvikelserna delades in i artikulationsavvikelser och velofarynxfunktion. Artikulationsavvikelserna delades ytterligare in i tillbakadragen oral artikulation och icke-oral artikulation. Tillbakadragen artikulation räknades om ett målfonem framför palatalt artikulationsställe realiserades palatalt eller bakom. Dubbelartikulation räknades som tillbakadragen om den innehöll minst en realisering palatalt, velart eller uvulart. Till icke-oral artikulation räknades glottala klusiler, glottal förstärkning, aktiva nasala frikativor och aktiva velofaryngeala frikativor. En typ av artikulationsavvikelse räknades som förekommande hos en deltagare om den påverkade mer än två av samtliga målljud.

Velofarynxfunktionen bedömdes utifrån en sammanvägd summa (VPC-summa) där hypernasalering, nasalt luftläckage/trycksvag realisering och icke-oral artikulation räknades samman. Skattningen av hypernasalering utfördes av studieförfattarna och en erfaren LKG-logoped på 24 omkodade filer, varav sex förekom två gånger för att möjliggöra beräkning av intrabedömarreliabilitet. Hypernasalering bedömdes i de nio orden och skattades i två led där det först avgjordes huruvida resonansen var inom normalvariation (=0). Om inte bedömdes den som 1=lätt, 2=måttlig eller 3=kraftig. Medianen för de tre bedömnas skattning användes i resultatredovisningen. För att kunna använda skattningen av hypernasalering (0-3) i beräkningen av VPC-summan delades skattningen in i tre möjliga poäng; normalvariation=0, lätt=1 och måttlig-kraftig=2. Nasalt luftläckage/trycksvag realisering och icke-oral artikulation beräknades i frekvens utifrån transkriptionen. En förekomst mindre än tre gånger gav 0 poäng, 3-5 gånger gav 1 poäng och 6 gånger eller fler gav 2 poäng. Därmed kunde den totala VPC-summan variera mellan 0-6 poäng, där 2-3 poäng klassades som marginellt nedsatt och 4-6 som inkompetent velofarynxfunktion.

En medelpoäng från ICS beräknades för varje deltagare. För ett barn saknades svar gällande en situation, således beräknades medelpoängen i det aktuella fallet på sex situationer istället för sju.

Statistisk analys

Talvariablerna PCC, artikulationsavvikelser, velofarynxfunktion och funktionell förståelighet var utifrån frågeställningen beroende variabler. För att undersöka ifall bakgrundsvariabler kan ha påverkat talresultatet undersöktes ålder för slutning av mjuka gommen, hörsel, fistel/restspalt och logopedkontakt tillsammans med ålder vid testning som oberoende variabler. För statistiska analyser användes programmet IBM SPSS Statistics version 22. För statistiska beräkningar bestämdes signifikansnivån $p < .05$. I tabell 3 går det att utläsa vilken typ av statistisk analys som utfördes för respektive variabel.

Tabell 3

Genomförda statistiska analyser för de undersökta variablerna.

Undersökt variabel	Typ av statistisk analys
PCC	Deskriptiv analys*. Spearmans rangkorrelationskoefficient för undersökning av sambandet mellan ålder och PCC.
Tillbakadragen artikulation	Deskriptiv analys*. χ^2 -test, Fisher Exact test, mellan yngre och äldre grupp (tvåsidig prövning).
Icke-oral artikulation	Deskriptiv analys*.
Velofarynxkompetens	Deskriptiv analys*.
Funktionell förståelighet	Deskriptiv analys*. Mann Whitney U-test för jämförelse av den yngre och den äldre gruppen.
<i>Bakgrundsvariabler</i>	
Tidig/sen slutning av mjuka gommen	Deskriptiv analys i förhållande till samtliga talvariabler förutom ICS.
Hörselnedsättning	Deskriptiv analys i förhållande till samtliga talvariabler förutom ICS.
Förekomst av fistel/restspalt	Deskriptiv analys i förhållande till samtliga talvariabler förutom ICS
Logopedkontakt	Deskriptiv analys i förhållande till samtliga talvariabler.
Andra missbildningar/påverkade utvecklingsfaktorer	Deskriptiv analys av samtliga talvariabler hos respektive deltagare.

Kommentar. *I den deskriptiva analysen uppgavs resultatet för hela gruppen, den yngre och den äldre gruppen.

Reliabilitet

Bedömarna transkriberade varje målljud enligt framtagna riktlinjer. Två dagar senare omkodades sex ljudfiler (33,3%) för en andra transkription och för beräkning av intrabedömarreliabilitet. Det upprättades kriterier för beräkning av en sammanlagd intra- och interbedömarreliabilitet utifrån kategorierna artikulationsställe, artikulationssätt och ifall nasalt luftläckage förekom. För artikulationsställe likställdes; a) labialt och labiodentalt, b) dentalt, alveolart, postalveolart och retroflect, c) palatalt, velart och uvulart d) icke-oralt. Dessutom likställdes apikala och interdental realiseringar av främre målljud. Om dubbelartikulation var transkriberat bedömdes det som samstämmigt om ett av ljuden återfanns i båda transkriptionerna med undantag för om icke-oral artikulation förekom i den ena men inte i den andra transkriptionen. Gränser för artikulationssätt drogs enligt följande; klusiler, nasaler, tremulanter, frikativor, laterala frikativor, approximanter och laterala approximanter. Undantag gjordes för /v/, /v/ och /β/ som alla likställdes. Då bedömarna inte behärskade språket bedömdes ingen skillnad för på- och avtoning. Nasalt luftläckage (nasala genomslag och velofaryngeala friktionsljud) och trycksvag realisering av konsonanter likställdes och räknades som VPI-symptom. Intrabedömarreliabi-

litet beräknades punkt-för-punkt där den ena bedömare fick 79,2% och den andra 73,6%, vilket anses vara en acceptabel intrabedömarreliabilitet. Transkriptionen med högst intrabedömarreliabilitet valdes för resultatredovisning.

Interbedömarreliabilitet för transkription beräknades utifrån kategorierna sammanlagd, artikulationsställe, artikulationssätt, icke-oral artikulation, VPI-symptom. Den sammanlagda samstämmigheten var låg, 58,6% (44,4-83,3%). God interbedömarreliabilitet kunde noteras för samtliga kategorier förutom för VPI-symptom där endast acceptabel interbedömarreliabilitet uppnåddes, således kan det antas att den sammanlagda interbedömarreliabiliteten påverkades negativt av transkriptionen av VPI-symptom, se tabell 4.

Tabell 4

Interbedömarreliabilitet, punkt-för-punkt, för de olika kategorierna vid transkription.

Kategori av interbedömarreliabilitet	Samstämmighet	Intervall samstämmighet
Sammanlagd	58,6%	44,4-83,3%
Artikulationsställe	85,0%	61,1-100%
Artikulationssätt	86,7%	75-100%
Icke-oral artikulation	91,8%	75-100%
VPI-symptom	71,1%	55,6-86,1%

Intrabedömarreliabiliteten för hypernasalering var 50% (83,3% inom ett skalsteg) för bedömare 1 och 66,7% (100%) för bedömare 2 och 3. Mellan bedömare 1 och 2 var interbedömarreliabiliteten 41,7% (87,5% inom ett skalsteg), mellan bedömare 1 och 3 var den 20,8% (79,2% inom ett skalsteg) och mellan bedömare 2 och 3 var den 50% (83,3% inom ett skalsteg).

Resultat

Artikulation

Andel korrekt producerade konsonanter (PCC). Medianen för PCC för hela gruppen var 61,1%. Den yngre gruppens median var lägre och den äldre gruppen var något högre än för hela gruppen, se tabell 5. Spearmans rangkorrelationskoefficient visade att ålder vid testning korrelerade signifikant positivt med PCC ($r=,51$, $p < ,05$).

Tabell 5

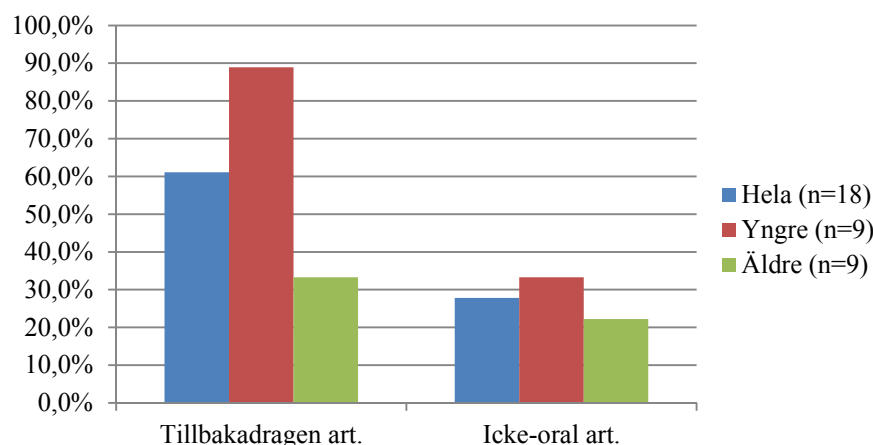
Andel korrekt producerade konsonanter (PCC), central- och spridningsmått för hela gruppen samt åldersgrupperna.

	Hela gruppen $n=18$	Yngre $n=9$	Äldre $n=9$
<i>M</i>	59,6 %	51,9 %	67,3 %
<i>Md</i>	61,1 %	50,0 %	63,9 %
<i>s</i>	20,5 %	21,8%	16,8 %
<i>Min.</i>	16,7 %	16,7 %	41,7 %
<i>Max.</i>	97,2 %	80,6 %	97,2 %

Kommentar. Yngre= deltagare <60 månader, Äldre= deltagare ≥60 månader
Artikulationsavvikelser

Tillbakadragen oral artikulation. Tillbakadragen oral artikulation förekom (minst 3 påverkade målljud) hos elva deltagare (61,1%) i hela gruppen, 8 deltagare (88,9%) i den yngre och 3 deltagare (33,3%) i den äldre gruppen, se figur 1. Antal påverkade målljud varierade mellan 0 och 17. Fisher exact visade en nästan signifikant skillnad mellan den yngre och den äldre gruppen för tillbakadragen oral artikulation, $\chi^2(df=1, N=18)=5,84$, $p=,05$.

Icke-oral artikulation. Målljud med icke-oral artikulation förekom (minst 3 påverkade målljud) hos fem deltagare (27,8%), hos tre i den yngre gruppen (33,3%) och hos två i den äldre gruppen (22,2%), se figur 1. Antal påverkade målljud varierade mellan 0 och 18 för hela gruppen.

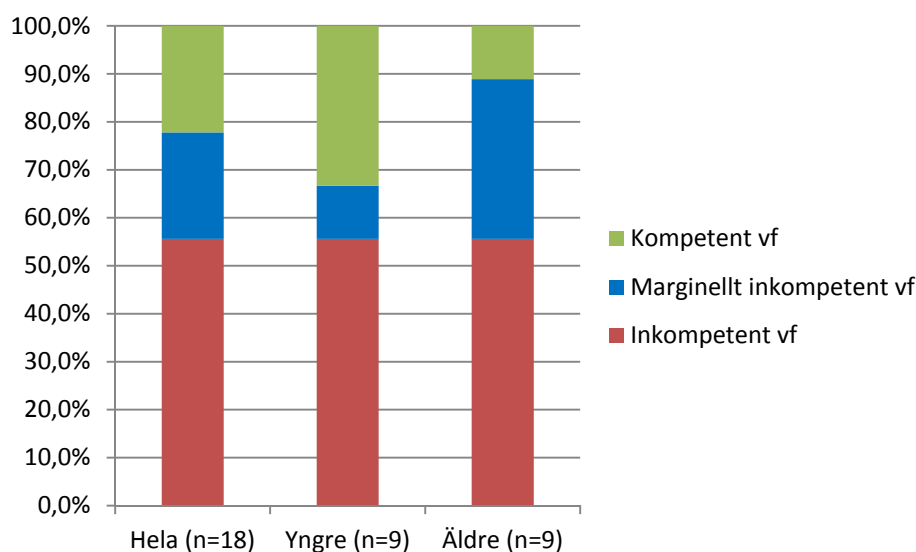


Figur 1. Andel deltagare som har tillbakadragen respektive icke-oral artikulation (förekomst = minst 3 påverkade målljud) i hela gruppen samt i den yngre och i den äldre gruppen.

Gällande båda artikulationsavvikelserna uppvisade fem deltagare varken tillbakadragen eller icke-oral artikulation.

Velofarynxfunktion

Tio deltagare (55,6%) bedömdes ha inkompetent velofarynxfunktion, fyra (22,2%) hade marginellt inkompetent, och fyra (22,2%) uppvisade normal funktion (se figur 2). Åtta deltagare hade marginellt inkompetent-kompetent velofarynxfunktion. En av dessa hade både fått en svalglambå och gjort en fistelslutning. VPC-summan varierade mellan 1 och 6 i samtliga gruppindelningar, således hade ingen en VPC-summa=0.



Figur 2. Andel deltagare med kompetent, marginellt inkompetent respektive inkompetent velofarynxfunktion i hela gruppen samt i den yngre och den äldre gruppen. VF=velofarynxfunktion

Sammanlagt uppvisade tre deltagare varken inkompetent velofarynxfunktion eller artikulationsavvikelser.

Föräldraskattning av förståelighet (ICS)

Medianen för föräldraskattningen av funktionell förståelighet var 4,0 på en skala mellan 1-5. Medelpoängen varierade mellan 2,4 och 5,0 mellan deltagarna. En lägre median påvisades för den yngre gruppen ($Md=3,9$, $min=2,4$, $max=5,0$) jämfört med den äldre gruppen ($Md=4,0$, $min=3,3$, $max=5,0$). Mann Whitney U-test påvisade ingen signifikant skillnad mellan den yngre och den äldre gruppen ($z= -,62$ $p=,54$).

Talvariabler i förhållande till övriga bakgrundsvariabler

Vid undersökning av huruvida tidig respektive sen slutning av mjuka gommen påverkade talvariablerna kunde ingen signifikant skillnad konstateras. För PCC fick deltagarna med tidig slutning en median på 57,0% ($min=30,3\%$, $max=80,6\%$) och gruppen med sen slutning fick en median på 61,1% ($min=16,7\%$, $max=97,2\%$). Gällande tillbakadragen artikulation hade sju (58,3%) av de med tidig slutning av mjuka gommen förekomst och tre (60%) av de med sen slutning. För icke-oral artikulation hade två (40%) av deltagarna med sen slutning av mjuka gommen förekomst och tre (25%) av deltagarna med tidig slutning. Vid undersökning av skillnader i förekomst mellan tidig och sen slutning av mjuka gommen gällande icke-oral artikulation visade ett χ^2 -test att ingen signifikant skillnad fanns mellan gruppindelningarna, $\chi^2(df=1, N=17)=,28$, $p=1,0$ vid tvåsidig prövning. Sju (58,3%) av deltagarna med tidig slutning av mjuka gommen hade inkompetent velofarynxfunktion och tre (60%) av deltagarna med sen slutning. Två (16,7%) av deltagarna med tidig slutning av mjuka gommen och en (20%) av deltagarna med sen slutning hade marginellt inkompetent velofarynxfunktion.

Fyra personer konstaterades ha hörselnedsättning. Hos en av deltagarna med hörselnedsättning noterades låg PCC (41,7%), hög grad av icke-oral artikulation (18 målljud) och högsta möjliga VPC-summa (6 poäng). För de andra tre varierade PCC mellan 69,4-80,6%. Tillbakadragen artikulation förekom hos två av dessa medan icke-oral inte noterades hos någon. En hade inkompetent velofarynxfunktion och en hade marginellt inkompetent velofarynxfunktion.

I endast två fall observerades fistel/restspalt bakom foramen incisivum. I båda fallen noterades en VPC-summa på 4 poäng, vilket innebar en inkompetent velofarynxfunktion. PCC låg på 61,1% respektive 50,0% och tillbakadragen artikulation förekom hos en av de två men ingen uppvisade icke-oral artikulation.

Tolv deltagare (66,7%) hade logopedkontakt. PCC skiljde sig inte åt oavsett logopedkontakt ($Md=61,1\%$). Sex av elva med tillbakadragen artikulation och fyra av de fem deltagarna med icke-oral artikulation hade logopedkontakt. Sju deltagare av tio med inkompetent velofarynxfunktion hade logopedkontakt och två av fyra deltagare med marginell nedsättning hade logopedkontakt. För föräldraskattning av förståelighet uppvisades en högre median, och därmed större förståelighet, hos de utan logopedkontakt ($Md=4,5$) än de med ($Md=3,8$).

Även andra missbildningar och utvecklingsfaktorer kontrollerades för, se tabell 6.

Tabell 6

Beskrivning av talvariabler hos de fem deltagare med andra missbildningar och påverkade utvecklingsfaktorer.

Missbildning/ påverkade utvecklingsfaktorer	PCC	Tillbakadragen art*.	Icke-oral art.*	VPC-summa	Funktionell förståelighet
Avsaknad av ytteröra, BAHA-implantat och hörapparat (insatt 3 mån innan bedömning).	41,7%	1	18	6	3,4
Amniotiskt bandsyndrom	33,3%	17	3	5	3,1
Avsaknad av njure, prehallax samt skolios	52,8%	14	0	4	4,0
Lätt utvecklingsstörning	61,1%	2	0	4	3,6
Mindre hjärtnissbildning	80,6%	0	0	2	5,0

*Artikulationsavvikelser som angetts i antal påverkade målljud.

Diskussion

Det fanns en stor variation hos deltagargruppen i PCC. En signifikant positiv korrelation mellan ålder vid testning och PCC påträffades, vilket tyder på förbättring med ökad ålder. De yngre barnen hade en signifikant högre förekomst av tillbakadragen artikulation. Icke-oral artikulation var låg för gruppen som helhet men förekom ofta hos två delta-

gare. Tio deltagare hade inkompetent velofarynxfunktion och fyra hade marginellt inkompetent velofarynxfunktion. Föräldraskattning av förståelighet var 4,0 i median med en variation mellan 2,4 och 5,0. En större andel av de med sen slutning (≥ 24 mån) av mjuka gommen hade icke-oral artikulation jämfört med tidig slutning. Inga entydiga samband kunde konstateras för övriga bakgrundsvariabler. Resultatet bör tolkas med försiktighet på grund av deltagargruppens storlek, stort åldersintervall och låg reliabilitet i transkription och skattning av hypernasalering.

Gällande PCC fann Klintö et al (2011) en median på 86% för femåringar med LKG med ett intervall från 39 till 100%. I en annan studie jämfördes enstegs- och tvåstegsslutningar hos treåringar där medianen var 76% hos de med tvåstegsslutning (Klintö, Svensson, Elander & Lohmander, 2014). Lohmander och Persson (2008) fann något lägre medianer för åldersgrupperna 3 år ($Md=52\%$), 5 år ($Md=83\%$) och 7 år ($Md=81\%$). I föreliggande studie blev medianen för PCC 61% för hela gruppen, 50% för de yngre och 64% för de äldre, vilket är något lägre än i jämförda studier. En åldersanpassning för beräkning av PCC gjordes i studien av Klintö et al (2014). Om en liknande anpassning hade gjorts i föreliggande studie skulle eventuellt en högre PCC för den yngre gruppen kunna uppnås. Vad som är gemensamt för föreliggande och diskuterade studier är en ökad PCC vid högre åldrar, vilket är förväntat utifrån den typiska tal- och språkutvecklingen i kombination med att kirurgiska insatser utförts. En parameter som kan förklara den förbättrade PCC:n är minskningen av tillbakadragen artikulation vid högre åldrar. För tidig respektive sen slutning av mjuka gommen noterades en något högre PCC för sen slutning, vilket inte överensstämde med förväntningarna eftersom att tidig slutning diskuteras ge fördelar för talet. Emellertid bör gruppens storlek beaktas samt att tre av fem med sen slutning också tillhörde den äldre gruppen, vilket kan ha bidragit till den högre medianen.

I studier där tvåstegsmetoder undersökts har tillbakadragen artikulation varit en vanlig talavvikelse (Lohmander, Friede & Lilja, 2012; Lohmander & Persson, 2008). Lohmander och Persson (2008) fann att 45% av 3-åringarna hade tillbakadragen artikulation, 25% av 5-åringarna och fann ytterligare en minskning vid 7 års ålder. Sell et al (2001) noterade i sin studie av barn med unilateral LKG opererade med olika operationsmetoder att 30% av 5-åringarna hade tillbakadragen artikulation till velart och uvulart artikulationsställe. I föreliggande studie hade 61% av barnen tillbakadragen oral artikulation vilket påvisar en högre grad jämfört med andra studier. Vad som däremot överensstämde mellan studierna var att den tillbakadragna artikulationen var mindre i de äldre grupperna (Sell et al., 2001; Lohmander & Persson, 2008). Detta kan eventuellt förklaras av tidseffekt sedan slutning av hårda gommen där de äldre barnen fått mer tid för inlärninng utifrån de nya strukturella förutsättningarna. För tidig respektive sen slutning av mjuka gommen noterades ingen skillnad i förekomst av tillbakadragen artikulation, vilket motsvarade förväntat resultat. En sen slutning av hårda gommen har däremot visat sig kunna öka förekomsten av tillbakadragen artikulation hos treåringar (Willadsen, 2012), men detta har inte undersökts i föreliggande studie. Gällande logopedkontakt och tillbakadragen artikulation noterades en högre förekomst hos de som hade logopedkontakt än de som inte hade det. Det skulle kunna bero på att de med störst svårigheter uppsökt logoped.

Det uppstod svårigheter i jämförelse med tidigare studier för kategorin icke-oral artikulation då den inte har redovisats på samma sätt. I föreliggande studie hade fem deltagare (28%) icke-oral artikulation där både glottal artikulation och aktiv nasal frikativa inkluderades. Lohmander et al (2006) fann i sin studie av barn med total unilateral LKG att 5-åringarna och 7-åringarna rapporterade ha lika stor förekomst av glottal artikulation, cirka 10%. Lohmander och Persson (2008) fann en prevalens för glottal artikulation frekvent hos 15 % av deltagarna när de var 3 respektive 5 år och hos 20% av deltagarna när de var 7 år, medan förekomsten av faryngeal artikulation var minimal. I föreliggande studie var förekomsten högre än i jämförda studier men om hänsyn togs till enbart frekvent förekomst hade bara 11% av deltagarna icke-oral artikulation. Det var något fler deltagare med icke-oral artikulation i den yngre än i den äldre gruppen, vilket inte noterades i de andra studierna. Fler deltagare i gruppen med sen jämfört med tidig slutning uppvisade icke-oral artikulation, vilket också förväntades då förutsättningar för velofarynxfunktion getts senare. Alla deltagare med icke-oral artikulation utom en hade logopedkontakt, vilket inte är förvånande då den är en framträdande aktiv talavvikelse.

I många studier har skattning av velofarynxfunktion utförts och endast få studier som använder en sammanvägd summa för velofarynxfunktion har kommit till studieförfattarnas kännedom. Lohmander et al (2006) använde en VPC-summa och visade att 76-89% av 3-åringarna hade mer än 1 poäng, där summan kunde variera mellan 0 och 3. Förekomsten av den skattade inkompetenta velofarynxfunktionen i samma studie var drygt 60% för femåringar och drygt 50% för sjuåringar. I föreliggande studie hade 56% av 3:6-7:6-åringar inkompetent velofarynxfunktion, vilket kan anses vara i enlighet med ovan nämnd studie. VPC-summan höll sig konstant mellan gruppindelningarna, vilket var förväntat för ålder vid testning men inte för ålder vid slutning av mjuka gommen. Det oväntade resultatet för ålder vid slutning av mjuka gommen kan eventuellt förklaras av att grupperna inte var lika stora (12 respektive 5 deltagare). Utifrån studier som genomförts för restspalt (Lohmander-Agerskov et al., 1996a) och fistel (Henningsson & Isberg, 1987) har ett samband noterats mellan förekomst av restspalt/fistel och ökat nasalt luftläckage och trycksvag artikulation. Däremot kunde inga entydiga samband noteras mellan förekomst av restspalt/fistel och VPC-summa i föreliggande studie. Det skulle kunna förklaras av att endast två deltagare hade restspalt/fistel med vald definition, men vid undersökning framkom att fler barn hade oronasala kopplingar även i och framför foramen incisivum. Sju av tio deltagare med inkompetent velofarynxfunktion hade logopedkontakt, vilket skulle kunna förklaras av att de flesta även hade flera talavvikelser.

Faktum att deltagargruppen som helhet opererades betydligt senare jämfört med i Göteborg skulle ha kunnat påverka talresultaten negativt. Att ingen skillnad kunde konstateras mellan tidig och sen slutning kan utöver det som redan nämnts ha påverkats av gränssättningen två år samt att samtliga deltagare faktiskt opererats förhållandevis sent.

Föräldraskattning av förståelighet med ICS hamnade på 4,0 i median på en femgradig skala med en variation mellan 2,4 och 5,0. Resultatet är i enlighet med McLeods et al (2012) studie där en validering av ICS gjordes av deltagare i 4-5 års ålder vars förälder/lärare var bekymrad över barnets talproduktion ($M=3,9$) och skiljde sig signifikant från kontrollgruppen ($M=4,7$). Således konstaterades en nedsatt förståelighet för deltagarna på gruppnivå i föreliggande studie, vilket var förväntat. Ingen skillnad fanns mellan den

yngre och den äldre gruppen vilket var förvånande, men kan tyda på att föräldrarna skattade förståeligheten utifrån fler aspekter än PCC. En tendens till lägre funktionell förståelighet sågs hos barnen med logopedkontakt och skulle eventuellt kunna förklaras av att logopedkontakt ger större medvetenhet om barnets svårigheter hos föräldrarna eller att de hade störst talsvårigheter.

Ytterligare gällande logopedkontakt finns en begränsning i att föreliggande studie inte kvalitativt undersökt vilken typ av logopedbehandling som innefattas i logopedkontakten, vilket medför att det inte går att uttala sig om vilka eventuella effekter den skulle kunna ha på talet.

Som påtalats i bakgrunden finns ingen tydlig bestående korrelation mellan nedsatt hörsel och påverkad talutveckling hos barn med LKG även om påverkad talutveckling skulle kunna förväntas vid nedsatt hörsel. Även i föreliggande studie har det varit svårt att påvisa en koppling. Hörsel kan inte uteslutas som bakgrundsvariabel då alla deltagare inte genomgick audiometri samt att endast fyra deltagare hade hörselnedsättning och deras talresultat varierade stort.

Enligt de tre nationella standarderna som tagits fram i Storbritannien för 5-åringar med LKG ska 1) 50% ha tal inom normalvariationen 2) 70% inte ha strukturellt relaterade talavvikelser eller inte fått sekundär kirurgi eller fistelslutning, 3) 50% inte ha några LKG-relaterade artikulationsavvikelser. När dessa prövades nationellt drogs slutsatsen att standard 2 var för högt satt och standard 3 för lågt satt (Britton et al., 2014). I föreliggande studie uppnåddes ingen av standarderna och resultaten var betydligt lägre. Endast 16,7% bedömdes ha tal inom normalvariationen (jämför standard 1), 38,9% uppvisade inga symptom på inkompetent velofarynxfunktion (jämför standard 2) och 27,8% uppvisade inga LKG-relaterade artikulationsavvikelser (jämför standard 3). Dock bör tilläggas att det vid prövningen av standarderna ingick barn med olika typer av spalter och att variationen var stor mellan olika centra i Storbritannien. I föreliggande studie behövde definitionerna för varje standard anpassas något för att möjliggöra jämförelse, vilket kan ha påverkat de lägre resultaten i föreliggande studie. Att använda jämförelse med standarder för tal kan bidra till insikt om vilka insatser som behövs från teamet där de strukturellt relaterade avvikelserna kräver kirurgiska insatser medan LKG-relaterade artikulationsavvikelser främst kräver logopedisk intervention (Britton et al., 2014).

För artikulationsställe, artikulationssätt och förekomst av icke-oral artikulation konsonanter förelåg god interbedömarreliabilitet (>85%). När den sammanlagda interbedömarreliabiliteten beräknades blev den dock lägre (59%). Det största problemet förelåg vid transkription av trycksvag realisering, nasalt luftläckage och skattning av hypernasalering. Skalor för talbedömning är frekvent förekommande (Lohmander & Olsson, 2004) och hade kanske gett en högre reliabilitet men innebär en del begränsningar framförallt vid bedömning av konsonantproduktion. Snäv fonetisk transkription är av stor betydelse då den möjliggör en detaljerad kategorisering av talavvikelser, till skillnad från skattning (Sell, 2005). Klintö et al (2014) gjorde en grovfonetisk transkription och utförde skattningar av förekomst av nasalt luftläckage, hypernasalering och hyponasalering på tregradiga skalor. I studien beräknades överensstämmelse för artikulationsställe, artikulationssätt samt för på- och avtoning. Intrabedömarreliabiliteten varierade mellan 72% och 99% och interbedömarreliabilitet mellan 48% och 90% ($M=77\%$).

Gällande hypernasalering och nasalt luftläckage blev interbedömarreliabiliteten 43% respektive 46%. Chapman med kollegor (2008) uppnådde i en studie 85% i interbedömarreliabilitet med en variation på 78-91%, men hade uteslutit nasalt luftläckage i beräkningen. I jämförelse gällande både transkription och skattning hamnar föreliggande studie i underkant för samstämmighet mellan bedömare. Det bör dock beaktas att halvsnäv transkription användes och att nasalt luftläckage och trycksvag artikulation inkluderades. Andra tillvägagångssätt än skattning för perceptuell bedömning av resonans är inte känt av studieförfattarna. Intrabedömarreliabiliteten var högre än interbedömarreliabiliteten, dock fortfarande något lägre jämfört med ovan diskuterade studier. En instrumentell bedömning av hypernasalering hade varit värdefull som komplement till den perceptuella bedömningen.

Språkbakgrund hos bedömare är en faktor som kan påverka reliabiliteten i en tvärspråklig studie. I en studie av Cordero (2008) undersöktes ifall bedömarens språkbakgrund påverkade bedömningar av tal med velofaryngeal dysfunktion på tre olika språk. Skattningar utfördes av artikulationsavvikelser, hypernasalering och velofaryxfunktion. Resultaten visade på högst intra- och interbedömarreliabilitet i bedömningarna på bedömarens förstaspråk och sämst för det språk som skiljde sig mest från förstaspråket. I pilotprojektet för Scandleft varierade interbedömarreliabiliteten mellan 20-100% gällande skattning av hypernasalering. På grund av den låga reliabiliteten togs ett nytt tillvägagångssätt fram, vilket användes i föreliggande studie. Dock finns ännu inga publicerade värden att jämföra med. Gällande transkription varierade den exakta interbedömarreliabiliteten mellan 27% och 88%, vilket föranledde att kriterier upprättades där allofoner tilläts. Då uppnåddes en överensstämmelse mellan 53 och 89% (Lohmander et al, 2009), vilket kan jämföras med denna studies sammanlagda interbedömarreliabilitet med en variation mellan 44% och 83%.

Cordero (2008) påvisade även att reliabilitet i bedömningarna ökade med grad av lyssnarens erfarenhet av LKG. Skattningar av artikulationsavvikelser och hypernasalering var mer reliabla ju större erfarenhet bedömare hade. Detta stöds även av Lewis, Waterson och Houghton (2003) som undersökte skattning av hypernasalering men vägrade in ytterligare en parameter; akademisk träning. Klinisk erfarenhet gav högre reliabilitet men högst var kombinationen av de båda. Det kunde även konstateras att personer med klinisk erfarenhet skattade hypernasaleringen som mindre avvikande än personer utan klinisk erfarenhet, vilket till viss del även sågs i föreliggande studie. Det har även visats att hypernasalering tenderar att vara den talavvikelse som får lägst reliabilitet oavsett erfarenhetsgrad (Brunnegård, 2008). Den begränsade erfarenheten hos bedömare i föreliggande studie har försökt överbryggas genom träning av transkription och skattning av hypernasalering. Det går dock att ifrågasätta ifall träningen var tillräcklig.

Den låga reliabiliteten skulle således kunna förklaras av bedömarens otillräckliga kunskap i rumänska och av deras begränsade erfarenhet inom LKG. Ytterligare aspekter som kan ha påverkat reliabiliteten är ljudinspelningarnas kvalitet och inspelningssätt. Det förekom en del bakgrundsljud, brus och överlapp som inte uppmärksammades vid inspelningen. I föreliggande studie kan främst bedömningarna av hypernasal klang och förekomst av nasalt luftläckage ha påverkats negativt av detta.

Faktorer som kan ha påverkat bedömningen utöver det som redan nämnts är representativitet för deltagargruppen, materialet, tillvägagångssättet och språkliga aspekter i rumänskan. Antalet deltagare motsvarade 42,9% av de barn som behandlats på sjukhuset och som överensstämde med inklusionskriterierna, vilket påverkar generaliserbarheten av resultatet. Det observerades även att fem av barnen hade ytterligare missbildningar/påverkade utvecklingsfaktorer, där fyra av dem hade uttalade talavvikelser. Ytterligare en faktor som skulle kunna påverka representativitet är ifall de som valt att delta är barnen med störst talavvikelser. Gällande materialet visade det sig att deltagarna inte hade samtliga målord i sitt ordförråd, vilket skulle kunna förklaras av det stora åldersintervallet. Vidare noterades att en del barn producerade artikel framför varje målord och att flera brister uppkom i ordvalen, vilka påverkade den fonetiska kontexten. Därför hade en utförligare pilottestning av talmaterialet varit önskvärd. Meningar som komplement till ord är enligt Klintö et al (2011) ett sätt att komma åt kontextuell och prosodisk variation och samtidigt behålla reliabiliteten jämfört med spontantal. Anledningen till att meningar inte ingick var tidsbrist och bristande språkkunskap i rumänska. ICS möjliggjorde bedömning av förståelighet, vilket annars inte hade varit genomförbart eftersom bedömarna inte behärskade rumänska. Förståelighet är påverkat av mycket mer än bara talsignalen; tempo, lyssnarerfarenhet, hur väl talare och lyssnare känner varandra, innehållet i budskapet, bakgrundsljud och situation (Grunwell & Sell, 2001). ICS kan ha fångat fler av dessa aspekter än en oberoende bedömare som endast har en bild av barnet i testsituationen. På så vis lyfts förståelighet utifrån ett aktivitetsperspektiv och fokuserar även på samtalspartners förmåga att uppfatta den akustiska signalen.

Studieförfattarna upplevde att en del målljud var särskilt svårbedömda, däribland dentala och velara klusiler. Utifrån en språklig aspekt blev en diskussion och ett ställningstagande om gränsdragning relevant för tillbakadragen artikulation. [c] och [k] samt [j] och [g] är allofoner av samma fonem i rumänskan vilket talar för att de inte bör skiljas åt vid bedömningen av tillbakadragen artikulation. Utmaningen i bedömning av trycksvaghet skulle kunna förklaras av att tryckstarka konsonanter i bedömarnas förstaspråk svenska ofta har aspiration (Engstrand, 2004), vilket inte rumänskan upplevdes ha. Ytterligare ett språkljud som var svårtranskriberat i föreliggande studie var [s]. Det uppfattades i många fall som avvikande och transkriberades som en palatal tonlös frikativa eller som en dental frikativa med både central och lateral luftström. Bakåtflyttning och lateralisering av [s] är en vanlig talavvikelse vid LKG (Hutters & Brøndsted, 1987; Harding & Grunwell, 1998; Brøndsted, Grunwell, Henningsson, Janssonius & Karling, 1994). Då [s] etableras sent även i den typiska tal- och språkutvecklingen (Lohmander et al., 2005) kan bedömningen eventuellt ha medfört en viss underestimering av PCC och viss överestimering av tillbakadragen artikulation. Svårigheterna i bedömningen skulle alltså kunna förklaras av både språkliga aspekter och vanliga svårigheter vid bedömning av LKG-specifika talavvikelser.

Föreliggande studie utvärderar talet efter implementering av en operationsmetod utifrån ett samarbete mellan två centra, vilket tillför ett nytt perspektiv till forskningsområdet. I den medicinska utvärderingen av operationsmetoden påvisades goda resultat vilket skulle kunna föranleda höga förväntningar på talresultatet. Standarderna som sattes upp i Storbritannien uppnåddes inte av deltagargruppen i föreliggande studie. Däremot sågs mindre diskrepans för de enskilda talvariablerna i jämförelse med andra studier där icke-oral artikulation och velofarynxfunktion var i enlighet med tidigare studier, dock

noterades något lägre PCC och högre förekomst av tillbakadragen artikulering. Ingen entydig påverkan på talvariablerna kunde konstateras av de undersökta bakgrundsvariablerna men det bör beaktas att de flesta barnen opererades relativt sent. Resultatet bör tolkas med försiktighet med tanke på bedömarens bristande kunskap i rumänska, begränsade erfarenhet av LKG, inspelningarnas ljudkvalitet, den stora åldersspridningen och deltagargruppens storlek. En logoped på MSCCH kan med taluppföljningar tillföra LKG-teamet en kartläggning av vilka barn som har tal inom normalvariationen, vilka barn som behöver logopedisk behandling och vilka barn som behöver ytterligare kirurgiska insatser.

I framtiden skulle bedömningen kunna utvecklas genom att komplettera talmaterialet med meningar och att samtliga bedömningar görs tillsammans med erfarna LKG-logopeder och logopeder med rumänska som förstaspråk. För att kunna dra en slutsats om talresultatet efter implementeringen av Göteborgsmetoden på MSCCH måste jämförelse med talet hos barn opererade på SU utföras. För att däremot kunna dra en slutsats om talet blivit bättre jämfört med tidigare operationsprotokoll skulle en prospektiv, longitudinell studie med datainsamling av talet vara nödvändig både hos barnen opererade med Von Langenbeck och hos deltagarna i föreliggande studie när de uppnått samma åldrar. Föreliggande studie skulle kunna användas som en modell för undersökning av tal vid LKG på ett annat språk.

Referenser

- Atkinson, A., & Howard, S. (2011). Physical structure and Function and Speech Production Associated with Cleft Palate. I Howard & Lohmander (red:er.), *Cleft Palate Speech: Assessment and intervention* (ss.5-22) Chichester, UK: Wiley-Blackwell.
- Britton, L., M.Phil, L.A., Bowden, M., Harding-Bell, A., Phippen, G., & Sell, D. (2014). A cross-sectional cohort study of speech in five-year-olds with cleft palate ± lip to support development of national audit standards. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 51, 431-451.
- Broen, P., Devers, M., Doyle, S., Prouty, J., & Moller, K. (1998). Acquisition of linguistic and cognitive skills by children with cleft palate. *Journal of Speech, Language & Hearing Research*, 41, 676-687.
- Brøndsted, K., & Hutter, B. (1987). Strategies in cleft palate speech - with special reference to Danish. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 24, 126-13
- Brøndsted, K., Grunwell, P., Henningsson, G., Jansson, K., & Karlsson, J. (1994). A phonetic framework for the crosslinguistic analysis of cleft palate speech. *Clinical Linguistics and Phonetics*, 8, 109-125
- Brunnegård, K. (2008). Evaluation of nasal speech: a study of assessments by speech-language pathologists, untrained listeners and nasometry. Opublicerad doktorsavhandling, Umeå Universitet: Institutionen för klinisk vetenskap, Umeå.
- Brunnegård, K., & Lohmander, A. (2007). A Cross-Sectional Study of Speech in 10-Year-Old Children With Cleft Palate: Results and Issues of Rater Reliability. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 44, 33-44.

- Bureau, S., Penko, M., & McFadden, L. (2001). Speech outcome after closure of oronasal fistulas with bone grafts. *Journal of Oral Maxillofacial Surgery*, 59, 1108-1413
- Campbell Reid, D.A. (1962). Fistulae in the hard palate following cleft palate surgery. *British Journal of Plastic Surgery*, 15, 377-384.
- Chapman, K.L., Hardin-Jones, M.A., Goldstein, J.A., Halter, K.A., Havlik, R.J., & Schulte, J. (2008). Timing of Palatal Surgery and Speech Outcome, *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 45, 297-308.
- Charles Sturt University. (2014). <http://www.csu.edu.au/research/multilingual-speech/ics>, 141115.
- CLISPI (2014). <http://clispi.org/>, 141014
- Cordero, K.N. (2008). Assessment of Cleft Palate Articulation and Resonance in Familiar and Unfamiliar Languages: English, Spanish, and Hmong. Opublicerad avhandling, University of Minnesota, Faculty of the graduate school, Minneapolis, USA.
- Dhillon, R.S. (1988). The middle ear in cleft palate children pre and post palatal closure. *Journal of Social Medicine*, 81, 710–713.
- Dotevall, H., Lohmander-Agerskov, A., Ejnell, H., & Bake, B. (2002). Perceptual evaluation of speech and velopharyngeal function in children with and without cleft palate and the relationship to nasal airflow patterns. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 39, 409-423.
- Duffy, J.R. (2012). *Motor speech disorders: substrates, differential diagnosis, and management* (3:e upplagan). St. Louis Mo., London: Elsevier Mosby.
- Engstrand, O. (2004). *Fonetikens grunder*. Lund: Studentlitteratur
- Flynn, T. (2013) Hearing and middle ear status in children and young adults with cleft palate. Doktorsavhandling, Göteborgs universitet: Institutionen för neurovetenskap och fysiologi, Göteborg.
- Gordon ASD, Jean-Louis F, Morton RP. Late ear sequelae in cleft palate patients. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngol*. 15, 149–156.
- Government of Aragon. (2014). Aragonese. Portal of Augmentative and Alternative Communication - ARASAAC. <http://www.catedu.es/arasaac/>. 2014-12-08.
- Grunwell, P., & Sell, D.A. (2001). Speech assessment and therapy. I A.C.H. Watson, D.A. Sell & P. Grunwell (red:er). *Management of Cleft Lip and Palate*. London and Philadelphia: Whurr Publishers.
- Harding, A. & Grunwell, P. (1998). Active versus passive cleft-type speech Characteristics. *International Journal of language & communication disorders*, 33, 329–352
- Hartelius, L. (2008). Klassifikation av funktionstillstånd, funktionshinder och hälsa: ICF–perspektivet inom logopedi. I Hartelius, L., Nettelbladt, U., & Hammarberg, B. (red:er). *Logopedi* (ss.113-122). Lund: Studentlitteratur.
- Havstam & Lohmander. (2011). Communicative Participation. I Howard & Lohmander (red:er.). *Cleft Palate Speech: Assessment and intervention* (ss.305-316). Chichester, UK: Wiley-Blackwell.
- Henningsson, G., & Isberg, A. (1987). Influence of palatal fistulae on speech and resonance. *Folia Phoniatrica International Journal of Phoniatrics, Speech Therapy and Communication Pathology*. 39, 183-191.

- Henningsson, G., Kuehn, D.P., Sweeney, T., Trost-Cardamone, J., & Whitehill, T. (2008). Universal Parameters for the reporting speech outcomes in individuals with cleft palate. *Cleft Palate Craniofacial Journal*, 45, 1-17.
- Hodge, M. & Gotzke, C. L. (2007). Preliminary results of an intelligibility measure for English-speaking children with cleft palate. *Cleft Palate Craniofacial Journal*, 44, 163-174.
- Hutters, B., & Henningsson, G. (2004). Speech outcome following treatment in cross-linguistic cleft palate studies: Methodological implications. *Cleft Palate Craniofacial Journal*, 41, 544-549.
- IPDTC Working Group (2011). Prevalence at birth of cleft lip with or without cleft palate: data from the international perinatal database of typical oral clefts (IPDTC). *Cleft Palate Craniofacial Journal*, 48, 66-81
- John, A.J., Sell, D., Sweeney, T., Harding-Bell, A., & Williams, A. (2006). The Cleft Audit Protocol for Speech—Augmented: A Validated and Reliable Measure for Auditing Cleft Speech. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 43, 272-284.
- Karling, J., Larson, O., & Henningsson, G. (1993). Oronasal fistulas in cleft palate patients and their influence on speech. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery*, 27, 193-201.
- Karolinska Institutets Universitetsbibliotek. (2015). Praktisk Utbildning för Multimediaanvändning. <http://puma-lkg.se/> 2015-01-20
- Klintö Kristina., Salameh Eva-Kristina., Svensson Henry et al. (2011). The impact of speech material on speech judgement in children with and without cleft palate. Hämtad från <http://dx.doi.org/10.3109/13682822.2010.507615> . 141018
- Klintö, K., Svensson, H., Elander, A., & Lohmander, A. (2014). Speech and Phonology in Swedish-Speaking 3-Year-Olds with Unilateral Complete Cleft Lip and Palate Following Different Methods for Primary Palatal Surgery. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 51, 274–282
- Kuehn, D.P. & Moon, J.B. (1998). Velopharyngeal closure force and levator veli activation levels in varying phonetic contexts. *Journal of Speech Language Hearing Research*, 41, 51-62.
- Lewis, K.E., Watterson, T.L., & Houghton, S.M. (2003). The influence of experience and academic training on ratings of nasality. *Journal of Communication Disorders*, 36, 39-48
- Lohmander-Agerskov, A. (1998). Speech outcome after cleft palate surgery with the Göteborg regimen including hard palate closure. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive and Hand Surgery*, 32, 63-80.
- Lohmander A., & Olsson M. (2004). Methodology for perceptual assessment of speech in patients with cleft palate: a critical review of the literature. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 41, 64-70.
- Lohmander, A., Olsson, M., & Flynn, T. (2011). Early consonant production in Swedish infants with and without unilateral cleft lip and palate and two-stage palatal repair. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 48, 271-285.
- Lohmander, A., Friede, H., Elander, A., Persson, C., & Lilja, J., (2006) Speech development in patients with unilateral cleft lip and palate treated with different delays in closure of the hard palate after early velar repair: A longitudinal perspective. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive and Hand Surgery*, 40, 267-274

- Lohmander, A. & Howard, S. (red:er). (2011). Speech assessment and intervention. *Cleft Lip Palate Speech - Assessment and Intervention* (ss.123-127) . Chichester, UK:Wiley-Blackwell.
- Lohmander, A., & Persson, C. (2008). A longitudinal study of speech production in swedish children with unilateral cleft lip and palate and two-stage palatal repair. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 45, 32-41.
- Lohmander, A. (2011), Surgical Intervention and Speech Outcomes in Cleft Lip Palate, *Cleft Lip Palate Speech - Assessment and Intervention* (ss. 55-86). Chichester, UK: Wiley-Blackwell.
- Lohmander, A., Friede, H., & Lilja, J. (2012). Long-term, longitudinal follow-up of individuals with unilateral cleft lip and palate after the gothenburg primary early veloplasty and delayed hard palate closure protocol: speech outcome. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*.49, 657-671.
- Lohmander, A., Borell, E., Henningsson, G., Havstam, C., Lundeborg, I. & Persson, C. (2005). SVenskt Artikulations- och Nasalitets TEst. Stockholm: Pedagogisk Design.
- Lohmander, A., Friede, H., Elander, A., Persson, C., & Lilja, J. (2006). Speech development in patients with unilateral cleft lip and palate treated with different delays in closure of the hard palate after early velar repair: A longitudinal perspective. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery*, 40, 267-274
- Lohmander, A., Persson,C., & Owman-Moll, P. (2002). Unoperated clefts in the hard palate speech deficits at age 5 and 7 years and the relationship to cleft size. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive surgery and hand surgery*, 36, 332-339.
- Lohmander, A., Willadsen, E., Persson, C., Henningsson, G., Bowden, M., & Hutters, M.A. (2009). Methodology for speech assessment in the scandcleft project - an international randomized clinical trial on palatal surgery: experiences from a pilot study. *Cleft Palate- Cranofacial Journal*, 46, 347-362.
- Lohmander-Agerskov, A., Dotevall, H., Lith, A., & Söderpalm, E. (1996 b). Speech and velopharyngeal function in children with an open residual cleft in the hard palate, and the influence of temporary covering. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 33, 324-332.
- Lohmander-Agerskov, A., Friede, H., Lilja, J., & Söderpalm, E. (1996 a). Delayed closure of the hard palate: a comparison of speech in children with open and functionally closed residual clefts. *Scandinavian Journal of Plastic and Reconstructive Surgery and Hand Surgery*, 30, 121-127.
- Mc Leod,S., Harrison, L.J. & Mc Cormack, J. (2012). The intelligibility in context scale: validity and reliability of a subjective rating measure. *Journal of Speech Language and Hearing Research*, 55, 648–656.
- Mossey, P., & Castillia, E..(2003) *Global registry and database on craniofacial anomalies*. Geneva: World Health Organization
- Nettelbladt, U. (2011). Fonologisk utveckling. *Språkutveckling och språkstörning hos barn*. Nettelbladt, U., & Salameh, E-K. (red:er). Lund: Studentlitteratur AB.
- O’Gara, M.M., Logemann, J.A., & Rademaker, A.W. (1994). Phonetic features by babies with unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 31, 122-134.
- Pereira, V.J., Sell, D., & Tuomainen, J. (2013). Effect of maxillary osteotomy on speech in cleft lip and palate: perceptual outcomes of velopharyngeal function. *International Journal of Language and Communication Disorders*, 48, 640-650.

- Riski, J.E. (2011). Secondary Management and Speech Outcome. I S. Howard & A. Lohmander (red:er). *Cleft Lip Palate Speech - Assessment and Intervention* (ss. 87-104). Chichester, UK: Wiley-Blackwell.
- Robinson PJ, Lodge S, Jones BM, Walker CC, Grant HR.(1992) The effect of palate repair on otitis media with effusion. *Plastic and Reconstructive Surgery*. 89, 640–645.
- Sahlgrenska Universitetssjukhuset. (2012). <http://www.sahlgrenska.se/sv/SU/Vard-utbud/Plastikkirurgi/Diagnoser/Ansiktsskador-och-missbildningar-i-ansiktet/Lapp-kak-gomspalt/> 2015-03-11 , senast uppdaterad: 2012-09-07.
- Scherer, N., & Louw, B. (2011). Early communication assessment and intervention. I S. Howard & A. Lohmander (red:er). *Cleft Lip Palate Speech - Assessment and Intervention* (ss.259-274). Chichester, UK:Wiley-Blackwell
- Sell, D., Grunwell, P., Mildinhall, S., Murphy, T., Cornish, T.A., Bearn, O., Shaw, D., William, C., Murray, J. Williams, J., Alison C., & Sandy J. R. (2001). Cleft Lip and Palate Care in the United Kingdom—The Clinical Standards Advisory Group (CSAG) Study. Part 3: Speech Outcomes. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, January 2001, 38, 30-37.
- Sell, D. (2005). Issues in perceptual speech analysis in cleft palate and related disorders: a review. *International journal of language and communication disorders*, 40, 103–121.
- Shaw, W.C., Semb, G., Brattström, V., Mølsted, K., Prahl-Andersen, B. Nelson, P. Gundlach, K.K.H. (2001). The Eurocleft Project 1996-2000. *Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery*, 29, 131–140.
- Shkoukani, M.A., Lawrence, L.A., Liebertz, D.J. & Svider, P.F. (2014). Cleft Palate:A clinical review. *Birth Defects Research Part C: Embryo Today: Reviews*, 102, 333-342.
- Socialstyrelsen. (2003.) Klassifikation av funktionstillstånd, funktionshinder och hälsakortversion. (Socialstyrelsen 2003-4-2). Stockholm: Bjurner och Bruno AB.
- Spataru, R., & Mark, H. (2014). Changing strategy and implementation of a new treatment protocol for cleft palate surgery in “Maria Sklodowska Curie” (MSC) Children’s Hospital, Bucharest, Romania. *Journal of Plastic Surgery and Hand Surgery*. 48, 356-361
- The International Phonetic Association. (2014). <https://www.internationalphonetic-association.org/content/ipa-chart>. 2014-10-03.
- TOPS. (2013). TOPS Trial Protocol Version 3.0. *Timing of Primary Surgery for Cleft Palate: A randomised trial of palate surgery at age 6 months versus age 12 months*. Erhållen i kontakt med projektledare; <http://www.tops-trial.org.uk/contact.html>
- Tuncbilek G. T., Özgür F., Belgin E. (2003). Audiologic and tympanometric findings in children with cleft lip and palate. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 40, 304-309.
- Van Demark. (1969). Consistency of articulation of subjects with cleft palate. *The Cleft Palate Journal*, 6, 254-262.
- Van Lierde, K.M., De Bodt, M., Van Borsek, J., Wuyts, S.P. & Van Cauwenberge, P. (2002). Effect of cleft type on overall speech intelligibility and resonance. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 54, 158–168
- Whitehill, T. (2002). Assessing intelligibility in speakers with cleft palate: a critical review of the literature. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*, 39, 50-58.
- Willadsen, E. (2012). Influence of timing of hard palate repair in a two-stage procedure on early speech development in Danish children with cleft palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 49, 574-595.